

CASE REPORT

자연 소실된 간의 거대 단순낭종 1예

이동민, 권오상, 최윤이, 신승각, 장승준, 서현정, 이종준, 최덕주, 김연수, 김주현
가천대학교 길병원 내과

Spontaneously Resolving of Huge Simple Hepatic Cyst

Dong Min Lee, Oh Sang Kwon, Youn-I Choi, Seung Kak Shin, Seung Jun Jang, Hyunjung Seo, Jong Joon Lee, Duck Joo Choi, Yun Soo Kim and Ju Hyun Kim

Department of Internal Medicine, Gachon University Gil Medical Center, Incheon, Korea

Simple hepatic cysts are common benign liver lesions that usually have no malignant capability. They are generally asymptomatic and are often found incidentally by abdominal imaging procedures. Treatment becomes necessary, however, when huge hepatic cysts cause symptoms and develop complications, such as hemorrhage, adjacent organ damage, and infection. Several therapeutic options have been performed for symptomatic and huge cysts, including the aspiration of cystic fluid, infusion of various sclerosing agents, and surgical intervention. The optimal management of huge hepatic cysts is controversial and each option has its complications and limitations. This paper reports a case of a 66-year-old woman diagnosed with a simple hepatic cyst 2 years earlier, who was referred to hospital due to abdominal pain. The diagnosis was a huge hepatic cyst with symptoms by abdominal imaging studies. During the follow-up period, the huge cysts resolved spontaneously without treatment. (*Korean J Gastroenterol* 2018;72:86-89)

Key Words: Cysts; Liver; Spontaneous; Resolution

서론

간내 낭성 병변은 임상에서 비교적 흔하게 관찰될 수 있는 병변으로 크게 감염성 낭성 병변과 비감염성 낭성 병변으로 구분할 수 있다. 감염성 낭성 병변으로는 화농성 간농양, 아메바성 간농양, 간포충낭(hydatid cyst) 등에 의한 병변이 있으며, 비감염성 낭성 병변은 단순 낭종, 선천성 간섬유증, 다낭성 간질환, 카롤리병, 담관낭선종 등을 포함하게 된다. 비감염성 낭성 병변 중 담관낭선종을 제외하고는 대부분이 담관 발생이 정상적으로 이루어지지 못하여 나타나는 섬유낭성간질환(fibrocystic liver disease)군에 속하며,¹ 발열과 오한 등의 증상을 동반하는 감염성 낭성 질환들과 임상적으로 쉽게 구분이 될 수 있다.

간의 단순낭종은 담도내 미세과오종의 진행성 확장에서 기원한 선천성 질환으로서 거대 낭종은 흔하지 않으며 담도계와 연결은 없고 안쪽에는 담즙액이 아닌 장액성 낭액이 채워져 있다.² 대부분은 증상이 없으며 낭종 크기의 변화 없이 안정적으로 유지되어 치료를 요하지 않는 것으로 알려져 있으나 크기에 따른 증상의 발현이 있을 수 있으며 환자의 불편감이 동반되는 경우 치료를 고려할 수 있다. 치료법으로는 경화 치료와 병행하는 초음파 유도하 경피적 흡인술, 복강경을 이용한 수술적 절제 등이 있으며 절제된 낭종벽은 조직 검사를 반드시 실시하여 악성 종양과의 감별을 시행하여야 한다.³ 간의 거대 단순낭종의 경우 침습적인 방법의 치료적 접근 없이 자연적으로 소실되는 경우는 극히 드물며, 국내에서는 아직까지 보고된 바가 없다. 저자들은 우상복부 통증을 주소로 내원

Received December 23, 2017. Revised April 16, 2018. Accepted April 18, 2018.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.
Copyright © 2018. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 권오상, 21565, 인천시 남동구 남동대로774번길 21, 가천대학교 길병원 내과

Correspondence to: Oh Sang Kwon, Department of Internal Medicine, Gachon University Gil Medical Center, 21 Namdong-daero 774beon-gil, Namdong-gu, Incheon 21565, Korea. Tel: +82-32-460-3778, Fax: +82-32-460-3408, E-mail: kos@gilhospital.com

Financial support: None. Conflict of interest: None.

한 환자를 간의 거대 단순낭종으로 진단하였으며 복통에 대한 통증 조절을 유지하며 추적 관찰 중, 거대 단순낭종이 자연적으로 거의 소실되는 드문 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

66세 여자가 일주일 전부터 시작된 우상복부 통증으로 응급실을 방문하였다. 환자는 과거력에서 간경변증을 동반하지 않은 만성 B형 간염이었으며, 3년 전 타병원에서 시행한 복부 전산화단층촬영에서 7 cm 크기의 간의 단순낭종 진단 후 영상의학적 추적 검사 없이 경과 관찰하던 환자로 일주일 전부터 쑤시는 듯한 양상의 간헐적인 복통이 시작되었다고 하였다. 가족력에 특이 소견은 없었으며 여행력에서도 특이 소견은 없었다.

혈압 120/80 mmHg, 맥박 72회/분, 호흡수 20회/분, 체온 37.3°C였으며 흉부 진찰에서 심음 및 호흡음은 정상이었다. 복부 진찰에서 장음은 정상이었으며, 간과 비장은 촉지되지 않았다. 복부 타진 시 우상복부에 압통이 있었으나 반동 압통이나 복막 자극 증상은 없었고, 촉지되는 종괴는 없었다.

말초혈액 검사에서 백혈구 9,870/mm³, 분획 중성구 78.6%, 혈색소 12.5 g/dL, 혈소판 232,000/mm³였으며, 요 검사는 정상 소견을 보였다. 혈청생화학 검사에서 AST 17 U/L, ALT 12 U/L, 총빌리루빈 0.5 mg/dL, ALP 126 U/L, GGT 17 U/L, 프로트롬빈 시간 10.6 sec, 혈액요소질소 22.7 mg/dL, 크레아티닌 0.5 mg/dL, Na 138 meq/L, 알부민 4.2 g/dL였다. 바이러스 표지자는 HBsAg 양성, HBeAg 음성이었으며 HBV DNA 1,207 IU/mL였고, 종양 표지자 AFP 1.90 ng/mL였다.

복부 전산화단층촬영에서 11 cm 크기의 분절을 동반하지 않으며 비교적 경계가 명확하고 조영증강이 되지 않는 거대 단실성 낭성 병변이 간 우상엽에서 S4 구역까지 관찰되었고 간 좌엽에도 다수의 작은 크기의 낭성 병변이 관찰되어 간의

단순낭종을 시사하였다(Fig. 1).

환자는 외래에서 통증 조절(acetaminophen/tramadol)하며 추적 관찰하였으며 1개월 후 시행한 복부 초음파에서 간 우엽 내부에 격막을 가지고 있으며 불균일한 초음파 영상을 보이는 분엽상의 거대 낭성 병변이 확인되어 합병낭종(complicated cyst) 의심하에 수술 권유하였으나 환자 보존적 치료를 위하여 수술은 보류되었다(Fig. 2). 임상양상은 처음보다 호전되고 있었으며 감염 등의 이상 징후는 관찰되지 않아 혈액 검사는 시행하지 않았고 항생제 등 추가로 사용한 약물은 없었다. 이후 6개월 간격으로 혈액 검사 및 복부 초음파 검사로 추적하였다. 첫 방문일로부터 18개월 후 시행한 복부 초음파에서 우상엽에 존재하던 간의 거대 단순낭종의 크기가 5.5×5.1 cm로 감소되어 있었으며, 다시 8개월 후 시행한 복부 초음파에서 원래 존재하던 간좌엽의 작은 낭종을 제외한 간우엽의 거대 낭성 병변은 거의 소실되었다(Fig. 3). 환자는 특별한 증상이 없는 상태로 외래 추적 관찰하였으며 이후 6개월 뒤 시행한 복부 전산화단층촬영에서 간좌엽의 작은 낭성 병변의 크기는 변화가 없었으나 간우엽의 거대 낭성 병변의 크기는 자연적으로 크게 감소되어 거의 소실된 양상을 보였다(Fig. 4). 환자는 현재 특별한 치료 없이 외래 추적 관찰 중이다.

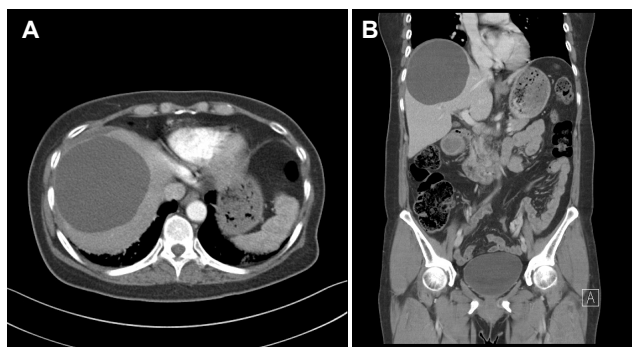


Fig. 1. Abdominal computed tomography showing an approximately 11 cm-sized huge unilocular cystic lesion in the right superior segment and segment 4 of the liver. (A) Axial view. (B) Coronal view.

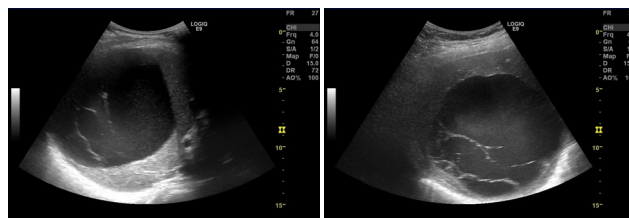


Fig. 2. Abdominal ultrasonography revealed an approximately 10.9×11 cm sized large cystic lesion in the right lobe of the liver and which had multiple floating septation with heterogeneous echogenicity.

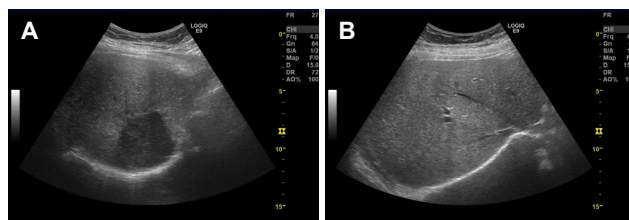


Fig. 3. Follow up abdominal ultrasonography was performed at (A) after 18 months of the initial study, the size of previous huge cystic lesions had decreased (10.9×11 cm → 5.5×5.1 cm). (B) After 26 months of the initial study, the lesions had almost resolved.



Fig. 4. Abdominal computed tomography imaging performed at 32 months after the initial study showed a markedly decreased size of the previous huge cystic lesions in the right lobe of the liver.

고 찰

최근 영상의학적 기법의 발전과 더불어 건강검진 등에서 우연히 발견되는 간내 낭성 병변의 수는 점차 증가 추세를 보이고 있다. 그 중 간의 단순낭종(simple cyst)은 전체 인구의 5-14%에서 발견되며 남성보다 여성에서 더 많이 나타나는 것으로 알려져 있다.⁴ 특히 거대 낭종의 경우, 이 증례와 같이 대부분이 50세 이후 여성에서 발견되는 것으로 보고되고 있다.⁵ 간의 단순낭종의 정확한 원인은 알려져 있지 않으나 담도 내 미세과오종의 진행성 확장² 및 간문맥 분지 주위 담관세포층과 관판(ductal plate)의 비정상적인 재형성으로 인하여 정상적인 담관이 형성되지 못하고 관판의 일부가 남아있는 경우가 원인으로 생각되고 있다.⁶ 최근 연구에서는 간의 단순낭종의 선천적인 요인에 대한 16번 염색체와의 연관성에 대하여 논의되고 있으며 여성에서 더 높은 빈도를 나타내는 원인으로 에스트로겐 호르몬과의 연관성에 대하여서도 연구가 이루어지고 있다.⁷

임상증상은 비특이적 또는 무증상일 수도 있으며, 임상적으로 의미가 있는 증상을 나타내는 경우는 드물지만 이 증례와 같이 낭종의 크기가 클수록 증상을 나타내는 경우가 많게 보고되었다.⁸ 낭종의 위치와 크기에 따라 임상양상이 다양하게 나타날 수 있는데, 하대정맥에 인접하여 압박이 가해지는 경우는 하지 부종, 간문맥을 압박하는 경우는 문맥고혈압, 그리고 담도계에 인접하는 경우는 황달 등을 유발할 수 있다.⁹

이 증례와 같이 크기가 큰 낭종의 경우 간내 캡슐의 신전에 따른 우상복부 통증이 나타나는 경우도 있다.

간의 낭종은 주로 초음파 검사를 통하여 우연히 발견되는 경우가 흔하며, 이 경우 복부 전산화단층촬영이나 자기공명영상을 촬영하게 된다. 간의 낭종의 영상의학적 소견은 주변과 경계가 구분되는 벽을 가진 원형의 종괴로 나타나게 되며, 개수와 크기는 매우 다양하다. 초음파 검사에서 내부 에코 없이 후부 에코 증강 소견이 나타나는 경계가 분명한 종괴 양상으로 관찰되며, 전산화단층촬영과 자기공명영상에서는 경계가 명확화면서 0-15 HU의 밀도를 지니고 물과 신호 강도가 비슷한(T1 저신호 강도, T2 고신호 강도) 양상의 조영증강이 되지 않는 종괴로 나타난다. 출혈이나 감염 등의 합병증이 생긴 경우에는 내부 격막, 가장자리 석회화, 조영증강이 나타날 수 있으며 비균일한 신호 강도를 보일 수 있다.¹⁰ 영상의학적 검사를 통하여 우연히 간내 낭성 병변을 발견하였을 때 우선적으로 다른 낭성 병변과의 감별이 필요하며 특히 증상이 있을 때는 다른 간내 낭성 병변과의 감별뿐만 아니라 궤양, 담석, 담낭염, 담도 종양과의 감별이 필요하다. 대부분의 단순낭종, 간포충낭, 그리고 담도 낭성 병변은 특징적인 영상 소견을 보이지만, 때때로 비특이적인 임상증상과 영상의학적 변이들로 나타날 수 있어 각 병변을 감별하는 것은 쉽지 않다. 40대 이상의 중년 여성에서 우연히 간내 낭성 병변이 발견된다면 일단 단순낭종 가능성이 가장 높지만 증상이 있는 경우 혈청 및 다른 영상의학적 검사를 시행하여 담도낭샘종, 담도낭샘암종, Caroli병 등을 감별하여야 한다.^{11,12} 최근에는 조영증강 초음파 검사가 사용되고 있는데, 동맥기와 문맥기 그리고 지연기의 조영증강에 따른 병변의 변화 양상을 명확하게 확인할 수 있게 되었으며 전산화단층촬영 또는 자기공명영상 검사에서 쉽게 감별이 되지 않는 간내 낭성 병변의 진단에 도움을 주는 역할을 하게 되었다.¹³

간의 단순낭종은 대부분 치료를 요하지 않지만 크기가 너무 크거나 증상이 동반되는 경우 치료를 고려한다. 비수술적 치료법인 초음파 유도하 경피적 흡인술은 비교적 간단한 시술이나 감염의 위험성이 높으며 또한 자주 재발하는 양상을 보인다. 경화 치료를 병행하는 경우 환자의 증상 호전 등 단기적으로 좋은 결과를 보였으나 역시 재발률이 높은 것으로 알려져 있다.¹⁴ 특히 낭종의 크기가 크거나 벽이 두꺼운 경우 치료 실패가 잘 나타난다. 최근에는 의학 수준의 발달로 인하여 수술적인 치료 측면에서 고식적인 수술 방법이 미세 침습 수술로 대체되고 있다. 우선적으로 복강경을 이용한 창냄술(fenestration)을 시행하게 되는데, 낭종벽의 일부를 제거하여 낭종과 복강 사이가 통하게 만듦으로써 낭종액이 복강으로 유입하여 흡수되도록 하여 낭종의 소실을 기대할 수 있다. 또한 낭종의 위치와 크기에 따라 간 절제술을 함께 시행하여 증상

의 호전을 기대할 수 있다.¹⁵ 절제된 낭종과 낭종벽은 반드시 조직 검사를 시행하여 다른 악성 종양과 감별하여야 하고 단순낭종에 합당하지 않은 소견이 발견된다면 반드시 간 절제술을 시행하여야 한다.¹⁶

이 환자의 경우 60대의 여성이며 병력 청취 및 신체 검진 결과에서 우상복부 통증 외 감염 소견이나 다른 이상 소견이 관찰되지 않았고, 복부 전산화단층촬영에서 조영증강되지 않는 비교적 경계가 명확한 간내 낭종성 병변을 확인하여 감염성 낭종의 가능성은 배제되었다. 임상양상을 고려하여 간의 거대 단순낭종으로 진단하였으나 비슷한 영상의학적 소견을 보일 수 있는 비감염성 낭종과의 감별 진단을 위하여 간 자기공명영상 검사를 고려하여 볼 수도 있겠다.

간의 단순낭종으로 진단된 경우 대부분은 증상이 없으며 낭종 크기의 변화 없이 안정적으로 유지되어 정기적인 영상의학적 검사를 통하여 추적 관찰하면서 치료를 요하지 않는 것으로 알려져 있으나 증례와 같이 단순낭종 크기가 거대할 경우, 자발성 출혈,¹⁷ 복강내 또는 담관 파열,¹⁸ 감염¹⁹ 등 합병증의 발생 빈도가 높은 것으로 보고되고 있다. 이러한 경우 대부분 침습적인 방법의 치료적 접근이 이루어지게 되는데, 이 증례에서는 거대 단순낭종이 특별한 치료 없이 자연적으로 거의 소실되었음을 추적 관찰 검사를 통하여 확인하였다. 이러한 증례는 매우 드문 것으로 해외에서는 2002년 Arai 등²⁰에 의하여 보고되었으며 국내에서는 한 차례도 보고되지 않았던 상태로 저자들은 이 환자를 통하여 간의 거대 단순낭종도 자연적인 소실이 가능하다는 것을 경험할 수 있었다. 다만, 거대 단순낭종을 추적 관찰하는 간격이나 기간에 대하여 언급하는 문헌은 아직 부족한 상태로 앞으로 이에 대한 연구가 필요할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- Drenth JP, Chrispijn M, Bergmann C. Congenital fibrocystic liver diseases. *Best Pract Res Clin Gastroenterol* 2010;24:573-584.
- Méndez-Sánchez N, Pichardo-Bahena R, Uribe M. Images in hepatology. Microhamartomas (Von Meyenburg Complexes). *Ann Hepatol* 2003;2:98.
- Reid-Lombardo KM, Khan S, Sclabas G. Hepatic cysts and liver abscess. *Surg Clin North Am* 2010;90:679-697.
- Gaines PA, Sampson MA. The prevalence and characterization of simple hepatic cysts by ultrasound examination. *Br J Radiol* 1989;62:335-337.
- Caremani M, Vincenti A, Benci A, Sassoli S, Tacconi D. Ecographic epidemiology of non-parasitic hepatic cysts. *J Clin Ultrasound* 1993;21:115-118.
- Jørgensen MJ. The ductal plate malformation. *Acta Pathol Microbiol Scand Suppl* 1977;(257):1-87.
- Asuquo M, Nwagbara V, Agbor C, Ootob F, Omotoso A. Giant simple hepatic cyst: a case report and review of relevant literature. *Afr Health Sci* 2015;15:293-298.
- Larsen TB, Rørvik J, Hoff SR, Horn A, Rosendahl K. The occurrence of asymptomatic and symptomatic simple hepatic cysts. A prospective, hospital-based study. *Clin Radiol* 2005;60:1026-1029.
- Haap M, Seeger A, Haas CS. Giant solitary hepatic cyst. *Liver Int* 2008;28:840.
- Brancatelli G, Federle MP, Vilgrain V, Vullierme MP, Marin D, Lagalla R. Fibropolycystic liver disease: CT and MR imaging findings. *Radiographics* 2005;25:659-670.
- Fernandez M, Cacioppo JC, Davis RP, Nora PF. Management of solitary nonparasitic liver cyst. *Am Surg* 1984;50:205-208.
- Palacios E, Shannon M, Solomon C, Guzman M. Biliary cystadenoma: ultrasound, CT, and MRI. *Gastrointest Radiol* 1990;15:313-316.
- Zarzour JG, Porter KK, Tchalepi H, Robbin ML. Contrast-enhanced ultrasound of benign liver lesions. *Abdom Radiol (NY)* 2018;43:848-860.
- Saini S, Mueller PR, Ferrucci JT Jr, Simeone JF, Wittenberg J, Butch RJ. Percutaneous aspiration of hepatic cysts does not provide definitive therapy. *AJR Am J Roentgenol* 1983;141:559-560.
- Macedo FI. Current management of noninfectious hepatic cystic lesions: a review of the literature. *World J Hepatol* 2013;5:462-469.
- Lynch MJ, McLeod MK, Weatherbee L, Gilsdorf JR, Guice KS, Eckhauser FE. Squamous cell cancer of the liver arising from a solitary benign nonparasitic hepatic cyst. *Am J Gastroenterol* 1988;83:426-431.
- Hanazaki K, Wakabayashi M, Mori H, et al. Hemorrhage into a simple liver cyst: diagnostic implications of a recent case. *J Gastroenterol* 1997;32:848-851.
- Salemis NS, Georgoulis E, Gourgoutis S, Tsohataridis E. Spontaneous rupture of a giant non parasitic hepatic cyst presenting as an acute surgical abdomen. *Ann Hepatol* 2007;6:190-193.
- Bourgeois N, Kinnaert P, Vereerstraeten P, Schoutens A, Toussaint C. Infection of hepatic cysts following kidney transplantation in polycystic disease. *World J Surg* 1983;7:629-631.
- Arai H, Nagamine T, Suzuki H, et al. Simple liver cyst with spontaneous regression. *J Gastroenterol* 2002;37:755-757.